Case Report / Olgu Sunumu

MEDICINE PALLIATIVE CARE

DOI: 10.47582/jompac.1007435
J Med Palliat Care 2022; 3(1): 71-73

Görme kaybı ve serebral apse ile seyreden geç tanı konan bir rinoorbitoserebral mukormikozis olgusu

A case of late diagnosed rhinoorbitocerebral Mucormycosis with visual loss and cerebral abscess

Salih Cesur[1], Melek Sena Altun[1], Çiğdem Ataman Hatipoğlu[1], Şerife Altun Demircan[1], Selin Şenol[1], Ülkü Öztoprak[1], Sami Kınıklı[1], Hafize Nalan Güneş[2], Tahir Kurtuluş Yoldaş[2]

[1]Sağlık Bilimleri Üniversitesi, Ankara Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Enfeksiyon Hastalıkları ve Klinik Mikrobiyoloji Kliniği, Ankara, Türkiye
[2]Sağlık Bilimleri Üniversitesi, Ankara Eğitim ve Araştırma Hastanesi,Nöroloji Kliniği, Ankara, Türkiye

Cite this article as/Bu makaleye atıf için: Cesur S, Altun MS, Ataman Hatipoğlu Ç, et al. Görme kaybı ve serebral apse ile seyreden geç tanı konan bir rinoorbitoserebral mukormikozis olgusu. J Med Palliat Care 2022; 3(1): 71-73.

ÖZ

Rino-orbito-serebral mukormikozis, *Zygomycetes* türü küf mantarlarının neden olduğu, mortalitesi ve morbidite oranı yüksek fırsatçı bir mantar enfeksiyonudur. Mukormikozis için en önemli risk faktörü kontrolsüz diyabet ve diyabetik ketoasidozdur. Bunun dışında; desferoksamin tedavisi, demir yüksekliği, immünosüpresif ilaçlar, kortikosteroid kullanımı diğer risk faktörleridir. Bu yazıda, geç tanı konulan rinoorbitoserebral mukormikozise bağlı olarak görme kaybı ve serebral apse gelişen 62 yaşında diyabetik bir erkek sunuldu. Hastaya cerrahi debridman ile birlikte lipozomal amfoterisin-B tedavisi uygulandı.

Anahtar Kelimeler: Rino-orbito-serebral mukormikozis, komplikasyon, görme kaybı, serebral apse

ABSTRACT

Rhino-orbito-cerebral Mucormycosis is an opportunistic fungal infection caused by *Zygomycetes* species mold fungi with a high mortality and morbidity rate. The most important risk factor for Mucormycosis is uncontrolled diabetes and diabetic ketoacidosis. Except this; desferoxamine treatment, high iron, immunosuppressive drugs, corticosteroid use are other risk factors. In this article, a 62-year-old diabetic man who developed vision loss and cerebral abscess due to late diagnosed rhinocerebral Mucormycosis was presented. The patient was treated with liposomal amphotericin-B with surgical debridement.

Keywords: Rhino-orbito-cerebral Mucormycosis, complication, vision loss, cerebral abcess

GİRİŞ

Mukormikozis (Zigomikozis), *Zygomycetes* sınıfında yer alan küf mantarlarının neden olduğu, farklı klinik tablolara neden olabilen mortalitesi yüksek fırsatçı bir mantar enfeksiyonudur. Mukormikozis, sıklıkla altta yatan diyabetik ketoasidoz, hematolojik malignite, uzun süreli kortikosteroid kullan hastalarda görülür, nadiren sağlıklı bireylerde de görülebilir (1,2). Mukormikozisin en sık görülen formu rinoserebral mukormikozistir. Rino-orbitoserebral mukormikozis formu daha nadir görülen bir formudur. Bu formda bulgular; orbital ağrı, oftalmopleji ve körlüğe kadar değişebilir (3). Bu yazıda, sağ gözde görme kaybı ve serebral apseyle seyreden geç tanı konulmuş rino-orbito-serebral mukormikozis olgusu sunularak literatür gözden geçirildi.

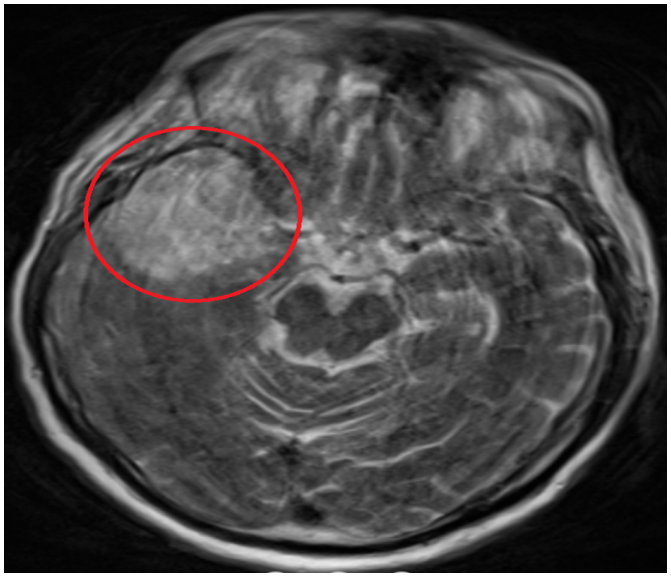
OLGU

Altmış iki yaşında erkek hasta baş ağrısı, sağ gözde görme kaybı, sağ yüzde uyuşma şikayetleriyle ve Tolosa-Hunt sendromu ön tanısıyla dış merkezden nöroloji polikliniğine başvurdu. Anamnezinden diyabetes mellitus ve astım bronşiyale tanılarının olduğu ve 6 ay önce COVID-19 enfeksiyonu nedeniyle favipiravir ve 10 gün süreyle kortikosteroid tedavisi aldığı öğrenildi. Nöroloji servisinde preseptal selülit ön tanısıyla seftriakson tedavisi alırken, mukormikozis ön tanısıyla enfeksiyon hastalıklarına konsülte edildi. Hastanın göz çevresindeki preseptal selülit lezyonunun ilerlemesi üzerine hastaya ampirik olarak preseptal selülit için meropenem 3x1 gr intravenöz (IV) ve rinoserebral mukormikozis ön tanısı içinse lipozomal amfoterisin-B 3-5 mg/kg/gün başlandı,

Corresponding Author/Sorumlu Yazar: Salih Cesur, Sağlık Bilimleri Üniversitesi, Ankara Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Enfeksiyon Hastalıkları ve Klinik Mikrobiyoloji Kliniği, Ulucanlar cad., Altındağ, Ankara, Türkiye
E-mail/E-posta: scesur89@yahoo.com
Received/Geliş: 08.10.2021 **Accepted/Kabul:** 01.11.2021

This work is licensed under a Creative Commons Attribution 4.0 International License.

kesin tanı için sinüs biyopsisi önerildi. Kraniyal manyetik rezonans görüntüleme (MRG)'de "Sağ temporal lob anteriorunda 45x37x36 mm boyutlarında lobule konturlu, santrali difüzyon kısıtlayan, çevresel kontrastlanan, bir dizi fokal kan yıkım ürünlerine sekonder parlama artefaktının izlendiği, geç serebrit-apse formasyonu izlenmiştir. Tanımlı lezyon komşuluğunda pakimeningeal kalınlaşma ve kontrastlanma kaydedilmiştir. Sağ maksiller ve etmoidal sinuslerde yaygın sekresyona ve inflamasyona sekonder sinyal değişiklikleri mevcuttur. Sağ etmoidal sinus komşuluğunda,sağ orbita medial ve inferior rektus kas ve çevresinde izlenen orbital apekse ilerleyip sağ kavernöz sinus ve sağ sfenopariyetal sinus trasesini tutan, kontrastlanan enfeksiyoz/inflamatuvar olduğu düşünülen sinyal değişiklikleri izlenmiştir. Sağ optik sinirde ödematöz sinyal değişikliği ve difüzyon kısıtlaması izlenmiştir. Beyin sapı ve serebelluma ait intensite homojendir" şeklinde raporlandı (**Resim**).



Resim. Kraniyal MRG'de Sağ temporal lob anteriorunda beyin apsesi

Hastaya fonksiyonel endoskopik sinüs cerrahisi uygulandı.Maksiler sinüs, etmoid sinüs ve sfenoid sinüslerdeki pürülan maeryal ve nekrotik alanlar temizlendı, sfenoplalatin bölgeden biyopsi için örnek alındı. Patoloji sonucu olarak , "Yaklaşık 4 cc hacminde krem kahve renkli yer yer nekrotik görünümde dokularda PAS ve Giemsa boyamasında mukormikozisle uyumlu spor ve hifa yapıları ile aktif süpüratif inflamasyon bulguları" olarak rapor edildi. Hastanın mukormikozis için lipozomal amfoterisin-B, serebriti için ise meropenem tedavisine devam edildi. Hastanın lipozomal amfoterin-B'ye bağlı olarak geliştiği düşünülen hiponatremisi sodyum replasmanı ile düzeltildi ve kan şekeri regülasyonu sağlandı. Hasta tedavisinin 37.gününde tedavisi devam etmek üzere kendi isteği ile başka bir merkeze sevk edildi.

TARTIŞMA

Mukormikozis (zigomikoz), *Zygomycetes* sınıfında yer alan küf mantarlarının neden olduğu fırsatçı bir mikozdur. *Zygomycetes* sınıfında yer alan başlıca küf mantarları; *Rhizopus*, *Lichtheimia* (önceki adı *Absidia*), *Mucor*, *Rhizomucor*, *Cunninghamella* cinsi mantarlar enfeksiyondan sorumludur. Mucurmikozise neden olan mantarların dağılımı coğrafi bölgelere göre farklılık gösterebilir (4). En sık enfeksiyona neden olan *Rhizopus* cinsi mantarlardır. Bu mantarlar toprakta, organik materyal ve çürümüş bitkilerde doğada yaygın olarak bulunur. Etken solunum, sindirim ve deri yoluyla bulaşabilir (4,5).

Özellikle diyabet ve diyabetik ketoasidoz, maligniteler, solid organ veya kemik iliği transplantasyonu, demir yüklenmesi, diğer immünosupresif ilaçlar, desferoksamin tedavisi, geniş spektrumlu antibiyotik kullanımı mukormikozis için önemli risk faktörleridir (2,5).

Hastalık farklı klinik tablolar şeklinde görülebilir. Bunlar içerisinde; rinoserebral mukormikozis, rinoorbitoserebral sendrom, pulmoner mukormikozis, kutanöz mukormikozis, gastrointestinal mukormikozis, disemine mukormikozis, izole apseler veya enfeksiyonlar yer almaktadır. En sık görülen formu rinoserabral mukormikozistir. Bunu pulmoner, kutanöz ve serebral formlar izler. *Zygomyetes* türü küf mantarlar damar invazyonu sonucunda trombüslere ve buna bağlı olarak nekroz ve infarkta neden olur. Komşuluk yolu, hematojen yol ve sinirler aracılığı ile santral sinir sistemine ulaşır. Cerrahi ve antifungal tedaviye rağmen mortalite oranları %40-70 arasında bildirilmektedir (2,4,5).

Sunduğumuz olguda rinoorbitoserebral mukormikozis klinik tablosu mevcuttu. Hastada mukormikozis için risk faktörü olarak diyabetes mellitus mevcuttu. Hastada orbita tutulumuna bağlı görme kaybı ve serebral apse gelişmesi nedeniyle gecikmiş bir olgu olarak değerlendirildi.

Sunduğumuz olguda başlangıçta Tolosa-Hunt sendromu (THS) sendromu tanısı mevcuttu. THS ağrılı oftalmopleji ile prezente olan kavernöz sinüs veya süperior orbital fissürün idyopatik granülamatöz hastalığıdır. Bu sendrom, tek yanlı (peri) orbital ağrı, ipsilateral oftalmopleji ve kortikosteroidlere iyi yanıt ile karakterize olan nadir bir ağrılı oftalmopleji tablosudur. THS kavernöz sinüs veya superior orbital fissürün bilinmeyen bir enflamasyonu sonucunda gelişir. Glukokortikoid tedavisi hem tanı hem de tedavi amaçlı olarak kullanılmaktadır. Tanıda uluslararası baş ağrısı derneği tanı kriterlerini güncellemiş granülomun MRG veya biyopsi ile gösterilmesi olarak belirlemiştir (6).

Mukormikozis, *Aspergillus* ve *Candida* enfeksiyonlarından sonra üçüncü en sık görülen fırsatçı mikoz etkenidir. İlk klinik semptomlar genellikle nonspefik olup, bu durum tanıda ve tedavide gecikmeye ve buna bağlı olarak komplikasyon gelişimine neden olabilir (7).

Rinoserebral mukormikoziste klinik bulgular sinüzitle başlar, hızlıca orbita, göz, optik sinir ve beyin dokusu gibi komşu dokulara yayılabilir. Fasiyal ödem, ağrı, nekroz, görme kaybı, siyah renkte akıntı,nazal kavite ve göz köşesi boyunca propitozis yaygın özelliklerdir. Mukormikoziste anjiyoinvazyon oldukça sıktır. Sfenopalatin ve santral retinal arterin tıkanıklığı sıklıkla körlükle sonuçlanır (2).

Literatürde rinoorbitoserebral mukormikozis olgularında görülen komplikasyonlar; bulanık görme, tam görme kaybı, bilinç değişikliği, kraniyal nöropati veya serebral apse olarak bildirilmiştir.Bu komplikasyonlar gözden hastalığın santral sinir sistemine yayılımı sonucunda gelişir (4). Sunduğumuz olguda da görme kaybı ile birlikte sağ temporal lobda apse mevcuttu.

Sinüsler veya orbita tutulumu olmaksızın izole beyin tutulumu da görülebilir. İzole beyin tutulumunda klinik bulgular ; inme benzeri sendrom, menenjit, intrakraniyal yer kaplayan kitle olabilir (2). Roden ve ark. (8) 928 mukormikozisli olguyu değerlendirdikleri çalışmasında; en sık görülen mukormikozis tutulumunu sinüsler (%39), akciğerler (524), ve cilt tutulumu (%19) olarak bildirmişlerdir. Mukormikozise bağlı olarak yayılım olguların %23'ünde saptanmıştır. Akciğer tutulumu olan hastaların büyük kısmında altta yatan hastalık olarak malignite saptanırken, sinüs tutulumu olanlarda en sık saptanan altta yatan hastalık diyabet olarak bildirilmiştir. Çok değişkenli analizde *Cunninghamella* türlerinin nende olduğu enfeksiyon ve dissemine hastalık artmış mortalite ile ilişkili saptanmıştır.

Sundaram ve ark. (2) 56 serebral mukormikozisli olguyu araştırdıkları çalışmalarında, 44 olguda rinoserebral mukormikozis, 20 olguda ise izole santral sinir sistemi mukormikozisi bildirmişlerdir. Kırk dört olgunun 31'inde diyabet predispozan faktör olarak belirlenmiştir. Toplam 44 hastanın 12'sinden doku kültürü alınmış, 8'inde *Rhizopus oryzae*, 2'sinde *Mucor* izole edilirken, bir olguda *Rhizopus* türü (spp.) ile birlikte *Candida* spp. saptanırken, 2 olguda kültürde üreme saptanmamıştır. Sunduğumuz olguda tanı sinüslerden alınan materyalin patolojik incelemesi ile konuldu, mantar kültürü yapılmadı. İnvaziv mukormikoziste altta yatan hastalıklar klinik bulgular ve klinik sonuçları etkileyebilir (9).

Guerreiro ve ark. (10) 15 yaşında diyabetik ketoasidozu olan bir erkek hastada orbito-rinoserebral mukormikozis bildirmişlerdir. Tedaviyle hasta iyileşmesine rağmen, rezidüel oftalmopileji ve sağ gözde körlük geliştiği rapor edilmiştir. Sunduğumuz olguda da tanıda olası gecikme nedeniyle sağ gözde görme kaybı mevcuttu.

Türkiye'den Kara ve ark. (1) diyabetik ketoasidozu olan iki hastada rino-orbitoserebral mukormikozis bildirmişlerdir. Olgular cerrahi debritman ve amfoterisin B ile tedavi edilmiştir. Tatar ve ark. (3) 72 yaşında kontrolsüz tip 2 diyabetes mellitusu olan bir kadın hastada orbital apseyle seyreden rino-orbital mukormikozis bildirmişlerdir. Olgu sol gözde ekzoftalmus, diplopi ve baş ağrısı yakınmaları ile müracaat etmiş, bilgisayarlı tomografide sol orbitada apse saptanmıştır. Endoskopik sinüs cerrahisi uygulanan hastada biyopsi materyalinin histopatolojik incelemesi sonucunda invaziv mukormikozis tanısı konmuştur. Sunduğumuz olguda da tanı endoskopik sinüs cerrahisi ile alınan materyalin patolojik incelemesi ile konmuştur.

Sonuç olarak, sunduğumuz olguda olduğu gibi altta yatan diyabet gibi predispozan faktörleri olan hastalarda mukormikozis akılda tutulmalı, erken tanı ve tedavi gecikme olmaksızın uygulanmalıdır.

ETİK BEYANLAR

Aydınlatılmış Onam: Bu çalışmaya katılan hastalardandan yazılı onam alınmıştır.

Hakem Değerlendirme Süreci: Harici çift kör hakem değerlendirmesi.

Çıkar Çatışması Durumu: Yazarlar bu çalışmada herhangi bir çıkara dayalı ilişki olmadığını beyan etmişlerdir.

Finansal Destek: Yazarlar bu çalışmada finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

Yazar Katkıları: Yazarların tümü; makalenin tasarımına, yürütülmesine, analizine katıldığını ve son sürümünü onayladıklarını beyan etmişlerdir.

KAYNAKLAR

1. Kara M, Erdogan H, Toroslu T, et al. Rhino-orbito-cerebral Mucormycosis: two case reports in the light of the literature. Kulak Burun Bogasz İhtis Derg 2015; 25: 295-301.
2. Sundaram C, Mahadevan A, Laxmi V, et al. Cerebral zygomycosis. Mycoses 2005; 48: 396-407.
3. Tatar EC,Sürenoğlu UA, Işık E, Tütüncü E, Korkmaz H. Rhino-orbital Mucormycosis with orbital abscess : a case report. Kulak Burun Bogaz İhtis Derg 2011; 21: 102-5.
4. Binder U, Maurer E, Flörl CL. Mucormycosis--from the pathogens to the disease. Clin Microbiol Infect 2014; 20: 60-6.
5. Chayakulkeeree M, Ghannoum MA, Perfect JR. Zygomycosis: the re-emerging fungal infection. Eur J Clin Microbiol Infect Dis 2006; 25: 215-29.
6. Günaydın S, Baştan B, Acar H, Çevik N, Çokar Ö. Tolosa-Hunt sendromu: iki olgu sunumu. Med Bull Haseki 2015; 53: 308-12.
7. Bačová E, Chovanec F, Makohusová M, et al. Invasive rhino-orbito-cerebral Mucormycosis in pediatric patient with acute leukemia. Klin Onkol Spring 2020; 33: 138-44.
8. Roden MM , Zaoutis TE, Buchanan WL, et al. Epidemiology and outcome of zygomycosis: a review of 929 reported cases. Clin Infect Dis 2005; 1: 634-53.
9. Petrikkos G, Skiada A, Lortholary O, Roilides E, Walsh TJ, Kontoyiannis DP. Epidemiology and clinical manifestations of Mucormycosis. Clin Infect Dis 2012; 54: S23-34.
10. Guerreiro CA, Nobrega JP, Carvalho MP. Orbito-rhino-cerebral phycomycosis (Mucormycosis): report of a case. Arq Neuropsiquiatr 1980; 38: 99-105.